



Revista Española de  
**Cirugía Oral y  
 Maxilofacial**

[www.elsevier.es/recom](http://www.elsevier.es/recom)



## Caso clínico

# Melanoma mucoso en una localización extremadamente infrecuente: la base de lengua. A propósito de un caso y revisión de la literatura

Isidoro Rubio-Correa\*, Damián Manzano Solo de Zaldívar, Manuel Moreno Sánchez, Luís Ruíz Laza, David González Ballester y Florencio Monje-Gil

Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital Infanta Cristina, Badajoz, España

### INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

#### Historia del artículo:

Recibido el 28 de abril de 2013

Aceptado el 27 de mayo de 2013

On-line el 20 de noviembre de 2014

#### Palabras clave:

Melanoma maligno mucoso

Colgajo libre anterolateral de muslo

Fonación

Deglución

#### Keywords:

Malignant mucosal melanoma

Anterolateral thigh free flap

Phonation

Swallowing

### R E S U M E N

El melanoma primario en la cavidad oral es una neoplasia rara, especialmente en la lengua. Presentamos un caso de melanoma mucoso en la base de la lengua, una localización extremadamente infrecuente (en la literatura médica tan solo se han aportado unos 30 casos). El estudio de extensión no reveló lesiones metastásicas a distancia. El paciente fue tratado mediante glosectomía subtotal y vaciamiento cervical funcional bilateral. La lengua es una de las estructuras más difíciles de reconstruir, debido a su papel central en la fonación, la deglución y la protección de las vías respiratorias. El defecto fue reconstruido con colgajo libre microvascularizado anterolateral de muslo. El tratamiento quirúrgico se complementó con radioterapia e inmunoterapia adyuvantes. El postoperatorio se desarrolló sin complicaciones. En la actualidad, 13 meses después de la cirugía, el paciente se encuentra asintomático, no hay evidencia de recidiva de la enfermedad y no tiene ninguna dificultad en la deglución ni fonación.

© 2013 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

### Mucosal melanoma in an extremely rare location: base of the tongue. A case presentation and literature review

#### A B S T R A C T

Primary malignant melanoma of the oral cavity is a rare neoplasm, especially on the tongue. We report a case of mucosal melanoma at the base of the tongue, an extremely rare location (only about 30 cases have been reported in the literature). The extension study did not reveal any distant metastatic lesions. The patient was treated by sub-total glossectomy and bilateral functional neck dissection. The tongue is one of the most difficult structures to reconstruct, because of its central role in phonation, swallowing, and airway protection. The defect was reconstructed with an anterolateral thigh free flap. Surgical treatment was supplemented with adjuvant radiotherapy and immunotherapy. The post-operative period was

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: [Isirc84@gmail.com](mailto:Isirc84@gmail.com) (I. Rubio-Correa).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.maxilo.2013.11.001>

1130-0558/© 2013 SECOM. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

uneventful. At present, 13 months after surgery, patient is asymptomatic, with no evidence of recurrence of melanoma and has no difficulty in swallowing or phonation.

© 2013 SECOM. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

## Introducción

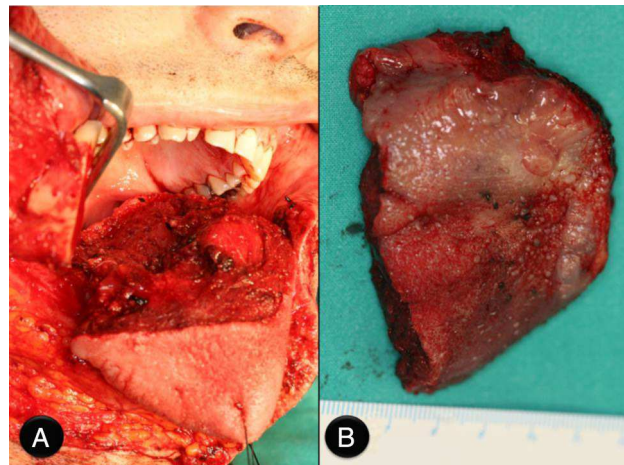
La presencia de melanocitos en la mucosa digestiva, respiratoria y urogenital explica la potencial aparición de melanomas en estas ubicaciones<sup>1</sup>. Sin embargo, el melanoma primario en la cavidad oral es una neoplasia rara (según Moore y Martin<sup>2</sup> representa aproximadamente el 1,7% de todos los melanomas y el 6,3% del melanoma de cabeza y cuello). Se presenta con igual frecuencia en el varón y en la mujer<sup>2</sup>, y se observa con mayor frecuencia en la raza caucásica<sup>2</sup>. En la cavidad oral aparecen con más frecuencia en la encía maxilar, en la fibromucosa palatina y en los labios<sup>2</sup>. Sin embargo, el melanoma primario es infrecuente específicamente en la lengua, y son aún más raros específicamente en la base de la lengua. En la literatura médica solo 30 casos han sido descritos<sup>3</sup>.

## Caso clínico

Paciente varón de 51 años de edad, con antecedentes clínicos de hernia de hiato esofágico, reflujo gastroesofágico, hepatitis A en la infancia y apendicectomía. Acude a la consulta, donde refiere que presenta «varias manchas negras en la lengua» de 3 meses de evolución que han aumentado en número en las últimas semanas, pero que no le producen sintomatología. En la exploración física se aprecian varias lesiones pigmentadas, con distribución difusa, que en total abarcan 3 × 3 cm de la base de la lengua (fig. 1). Estas lesiones son asintomáticas. No existe trismus, disfagia ni odinofagia. La movilidad lingual se mantiene conservada, y tampoco existen alteraciones en la sensibilidad lingual o en el gusto. En la exploración cervical no se palpan adenopatías. En un primer momento, debido al aspecto de las lesiones, se piensa como primera opción diagnóstica en lesiones de origen vascular. A pesar de su «aparente aspecto de benignidad», se planifica la biopsia incisional de las lesiones. Esta finalmente revela que se trata de un «melanoma mucoso». Debido al diagnóstico se

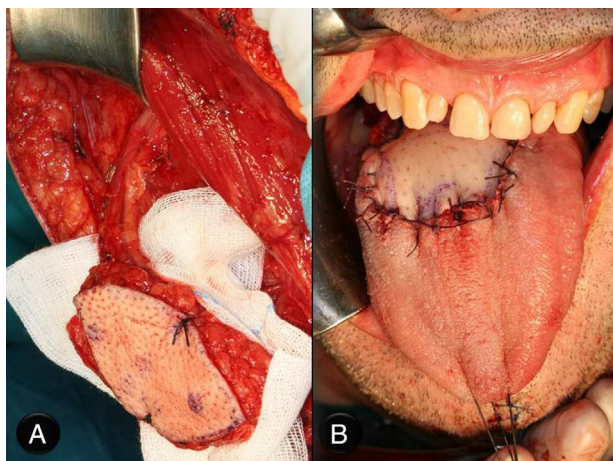


**Figura 1 – Imagen de las lesiones. Se puede apreciar la pigmentación y difusión de las mismas.**



**Figura 2 – A) Imagen intraoperatoria de la resección. Se puede apreciar el importante defecto creado tras la glosectomía subtotal, así como el abordaje realizado a través de queilotomía y mandibulotomía medias. B) Pieza quirúrgica de glosectomía.**

realiza estudio de extensión, que incluye tomografía computarizada cervicofacial, toracoabdominal y pélvica (body-TC) y tomografía por emisión de positrones (PET-TC). La body-TC es rigurosamente normal, mientras que la PET-TC demuestra un foco hipermetabólico en la base de la lengua, pero descarta lesiones metastásicas a distancia. El caso se presenta en sesión clínica conjunta con oncología radioterápica, decidiéndose tratamiento quirúrgico. La intervención comenzó con una traqueostomía temporal. A continuación se realizó la resección de las lesiones linguales con márgenes de seguridad de 2 cm, mediante queilotomía y mandibulotomía medias (fig. 2A y B). Se conservó la arteria lingual izquierda, para asegurar la vascularización y por tanto la viabilidad del remanente lingual. Además, debido a la localización en línea media de la base lingual, y para disminuir el riesgo de metástasis en tránsito u ocultas, se practicó el vaciamiento ganglionar funcional bilateral profiláctico. Por último, se llevó a cabo la reconstrucción funcional del defecto creado, para permitir al paciente conservar la función fonatoria y deglutoria tras la glosectomía subtotal. Así, ante la necesidad de aportar volumen al remanente lingual se optó por el colgajo fasciocutáneo anterolateral de muslo izquierdo, de 6 × 6 cm, basado en una única rama perforante septocutánea (fig. 3A y B). Los vasos receptores fueron la arteria tiroidea superior y la vena lingual derechas. Se colocaron drenajes cervicales aspirativos bilaterales, así como sonda nasogástrica (SNG). El paciente evolucionó de forma favorable y le fue dada el alta. Durante su estancia hospitalaria, que fue de 8 días, se le retiró la SNG una vez que comenzó a deglutir y se le suturó el traqueostoma. El resultado anatomopatológico definitivo fue informado como



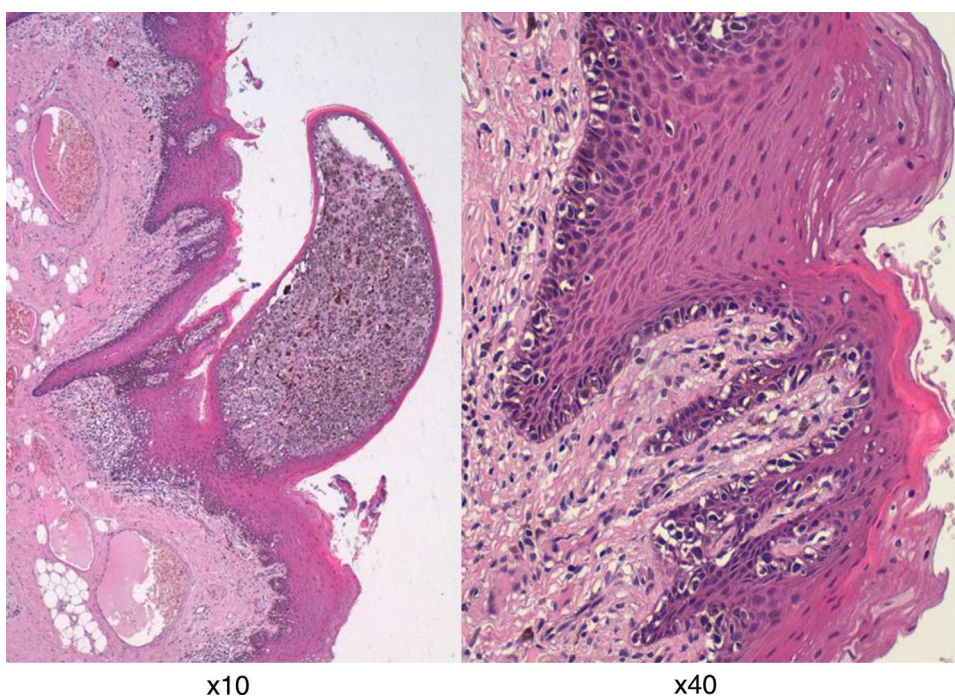
**Figura 3 - A) Imagen de la disección del colgajo fasciocutáneo anterolateral de muslo. B) Colgajo libre anterolateral de muslo adaptado sobre el defecto posglosectomía.**

«melanoma mucoso maligno, a 3 mm del margen quirúrgico, con un componente invasivo medido de 4,4 mm de ancho y 2,6 mm de profundidad. No se apreciaron metástasis en los ganglios linfáticos cervicales ni invasión vascular. En cuanto a la inmunohistoquímica, las células tumorales mostraron tinción positiva para S100 y HMB45, pero no para citoqueratinas. El tumor fue estadificado como T3 N0 M0» (fig. 4). Debido al escaso margen microscópico conseguido a pesar de la gran resección, se volvió a presentar el caso en sesión clínica conjunta con oncología radioterapéutica, decidiéndose la administración de radioterapia e inmunoterapia adyuvantes.

Así, 2 semanas después del tratamiento quirúrgico, el paciente comenzó el tratamiento radioterapéutico limitado a la base de la lengua, sin incluir la región cervical (60 Gy en 30 fracciones de 2 Gy), que se administró sin incidencias, desarrollando el paciente como únicos efectos de toxicidad una mucositis oral y dermatitis perioral, ambas de grado I. Paralelamente a la radioterapia, se llevó a cabo la inmunoterapia con interferón alfa-2b a dosis altas según la «pauta de Kirkwood», con buena tolerancia por parte del paciente. Esta pauta consiste en una primera fase de inducción con 20 millones de U/m<sup>2</sup> por vía intravenosa 5 días a la semana durante 4 semanas y una segunda fase de mantenimiento con 10 millones de U/m<sup>2</sup> por vía subcutánea una vez al día durante 3 días por semana durante 11 meses. En la actualidad, 13 meses después de la cirugía, el paciente se encuentra asintomático, no tiene ninguna dificultad en la deglución ni fonación, el colgajo ha metaplasiado correctamente (fig. 5) y no hay evidencia de recidiva de la enfermedad.

## Discusión

La presencia de melanocitos en la mucosa digestiva, respiratoria y urogenital explica la posibilidad de aparición del melanoma en estas ubicaciones<sup>1</sup>. La cavidad oral representa aproximadamente el 1,7% de todos los melanomas y el 6,3% del melanoma de cabeza y cuello<sup>2</sup>. Se presenta con igual frecuencia en el varón y en la mujer<sup>2</sup>, pero se observa con mayor frecuencia en la raza caucásica<sup>2</sup>. En la cavidad oral aparecen con más frecuencia en la encía maxilar, mucosa palatina y los labios<sup>2</sup>. En la revisión de la literatura médica se encontró que la mayoría de series clásicas de casos clínicos de melanoma en la cavidad oral, por ejemplo las de Moore y Martin<sup>2</sup>



**Figura 4 - Microfotografía en tinción hematoxilina-eosina (HE) a diferentes aumentos mostrando el crecimiento radial de los melanocitos anaplásicos con evidentes depósitos de melanina en el citoplasma, dispuestos en capas, directamente debajo del epitelio escamoso superficial de la lengua y en la unión entre el epitelio y el subepitelio.**



**Figura 5 – Imagen intraoral un mes después de la cirugía. Se puede observar la correcta adaptación del colgajo, que ha metaplasiado casi por completo.**

o la de Rapini et al.<sup>4</sup> incluyen la lengua como posible ubicación. Sin embargo, la base de la lengua es una localización extremadamente rara, con solo unos 30 casos aportados<sup>3</sup>. Por otra parte, la lengua es una de las estructuras más difíciles de reconstruir en la cavidad oral, debido a su papel central en la fonación, la deglución y la protección de las vías respiratorias<sup>5</sup>. Las opciones reconstructivas en la lengua se podrían clasificar en 2 categorías<sup>6</sup>: mantener la movilidad o proporcionar volumen. Según Pazardzhikliev et al.<sup>7</sup> en glossectomías con preservación del 30-50% de la musculatura original se prefiere mantener la movilidad de la lengua restante mediante un colgajo libre microvascularizado delgado y flexible, como lo son el colgajo sural o el colgajo radial antebraquial. Sin embargo, ante resecciones en las que se preserva menos de un 30% de la lengua original (este sería nuestro caso), la reconstrucción se debería encaminar hacia la consecución de un volumen adecuado para facilitar la deglución proporcionando un contacto de la «neolengua» con el paladar blando. Los colgajos libres microvascularizados que proporcionan mayor volumen son el de músculo recto abdominal, el de músculo dorsal ancho y el usado en nuestro caso, el colgajo anterolateral de muslo. Este último ha surgido en las últimas décadas como una opción muy popular para la reconstrucción de defectos de gran volumen en cabeza y cuello, debido a su fiabilidad y a la escasa morbilidad del área donante. Debido a su versatilidad, se suele utilizar tras grandes glossectomías tanto para proporcionar volumen como para garantizar una adecuada movilidad lingual. Otro aspecto de crucial importancia en el melanoma es el papel del tratamiento adyuvante al quirúrgico, debido a su mal pronóstico. La principal indicación del tratamiento radioterapéutico sería el control locorregional de la enfermedad. Y con respecto a la inmunoterapia, el único tratamiento formalmente aceptado es el interferón alfa-2b según la pauta de Kirwood et al.<sup>8</sup>. Sin embargo, su uso es controvertido, pues solo se ha mostrado útil en alargar el período libre de enfermedad sin afectar ni modificar la supervivencia global.

## Responsabilidades éticas

**Protección de personas y animales.** Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

**Confidencialidad de los datos.** Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

**Derecho a la privacidad y consentimiento informado.** Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

## Conflicto de intereses

La totalidad de autores declara que no existen conflictos de intereses.

## Agradecimientos

Al Dr. Mario Díaz Delgado, facultativo del Servicio de Anatomía Patológica del Hospital Infanta Cristina de Badajoz, por su ayuda y colaboración.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Gutman M, Inbar M, Chaitchik S, Merhav A, Pausner D, Skoznik Y, et al. Malignant melanoma of the mucous membranes. *Eur J Surg Oncol.* 1992;18:307-12.
2. Moore ES, Martin H. Melanoma of the upper respiratory tract and oral cavity. *Cancer.* 1955;8:1167-76.
3. Chiu TT, Lin HC, Su CY, Huang CC. Primary malignant melanoma of the tongue. *Chang Gung Med J.* 2002;25:764-8.
4. Rapini RP, Golitz LE, Greer RO Jr, Krekorian EA, Poulson T. Primary malignant melanoma of the oral cavity: a review of 177 cases. *Cancer.* 1985;55:1543-51.
5. Shah NG, Trivedi TI, Tankshali RA, Goswami JA, Shah JS, Jetly DH, et al. Molecular alterations in oral carcinogenesis: significant risk predictors in malignant transformation and tumor progression. *Int J Biol Markers.* 2007;22:132-43.
6. Engel H, Huang JJ, Lin CY, Lam W, Kao HK, Gazyakan E, et al. Strategic approach for tongue reconstruction to achieve predictable and improved functional and aesthetic outcomes. *Plast Reconstr Surg.* 2010;126:1967-77.
7. Pazardzhikliev DD, Shipkov CD, Yovchev IP, Khater RH, Kamishev IS. Functional reconstruction of subtotal glossectomy defects with radial forearm free flap: case report and review of literature. *Folia Med (Plovdiv).* 2012;54:60-5.
8. Kirkwood JM, Strawderman MH, Ernstoff MS, Smith TJ, Borden EC, Blum RH. Interferon alfa-2b adjuvant therapy of high-risk resected cutaneous melanoma: the Eastern Cooperative Oncology Group Trial EST 1684. *J Clin Oncol.* 1996;14:7-17.